左側下顎骨筋突起の外骨腫に由来した開口障害の1例

西嶋克巳・藤井康博・馬場宜道・早瀬育子

Limited opening of the mouth caused by exostosis of the left coronoid process of the mandible : report of a case

Katsumi NISHIJIMA・Yasuhiro FUJII・Norimichi BABA・Ikuko HAYASE

緒 言

口腔外科領域において、しばしば遭遇する症状の一つに開口障害があり、種々の原因があげられている。しかし筋突起に発生した骨腫による開口障害はきわめてまれである。

骨軟骨性外骨腫の発生頻度は、全身的には比較的多いが、顎口腔領域においては少なく、ことに筋突起に発生することはまれといわれている。

このたび私達は、左側下顎骨筋突起に発生した骨軟骨性外骨腫により開口障害をきたした稀有なる症例を経験したので、その概要を報告する。

症 例

患者：■■■■■，男性，25才，■■■■■。

初診：昭和44年9月■■■■日。

主訴：開口障害ならびに開口時左側顎関節部雑音。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：昭和42年7月頃、急に左側下顎臼歯部に軽度の自発痛と開口時左側顎関節部の疼痛をきたした。某歯科医にて「8智歯周囲炎の診断にて「8抜去するも、左側顎関節部疼痛軽減せず、開口障害著明となった。昭和42年9月より某大学口腔外科および整形外科などを受診、関節腔内注射、理学療法、薬物療法を受けるも、開口障害は軽減せず、昭和43年9月頃より開口時雑音を伴うようになり当科来院。

現 症

全身所見：体格中等度、栄養佳良。胸部X線像、E. K. G., 尿所見等異常なし。血圧 122~66 mmHg。

血液所見：血色素量 13.9 g/dl, 赤血球数 498×10^4 /cmm, 色素指数 0.87, 中性好性白血球 70% (杆状白血球

0%, 分葉核白血球 2%), 酸性好性白血球 0% 塩基好性白血球 2%, 単球 3%, リンパ球 25%, 栓球数 26.89×

(a)

(b)

写真 1 初診時顔貌 (a)
最大開口時 (b)

岡山大学医学部口腔外科学教室 (主任：西嶋克巳教授)
Department of Oral Surgery, Medical School, Okayama
University (Chief: Prof. Katsumi Nishijima)
受付 昭和47年6月22日

10⁴/cmm, 出血時間3.5分, 凝固時間9.5分.

血清化学検査: Na 138mEq/l, K 4.5mEq/l, Ca 9.8mEq/l, Al-P-ase 1.6 Bessey-u, ヲ氏反応陰性, GOT 13u, 膠質反応: ZnSO₄ 7u, Thymol 2u, CCLF (-), Co 6.

局所所見: 顔貌は左右対称, 両側顎関節部に発赤, 腫脹, 圧痛はなく, 開口時左側耳介前部に雑音および疼痛を認める. 開口域は上下中切歯間 10mm, 最大開口時に下顎正中線が左方に 7mm 偏倚. 左右顎下リンパ節はともに触れず.

口腔内所見: 8欠損, $\frac{7}{7} \frac{6}{6} \frac{6}{5} \frac{7}{7}$ アマルガム充填. 他の特記すべき病変なし.

X線所見: 頭部鼻尖前頭位後前撮影, 下顎側面撮影, 顎関節撮影により, 開口時左側関節突起の下顎頭の前方移動が制限され, 左側下顎骨関節突起は右側に比し短少で, 下顎頭後前の変形がみられ, 外形不明瞭.

写真 2 術前X線写真(頭部後前撮影)

臨床診断: 左側顎関節強直症

処置ならびに経過

昭和44年11月■日顎関節授動手術施行. すなわち経鼻挿管, G-O-F 全身麻酔下に, 左側耳介前縁に沿って皮切, 鈍的に皮下結合組織を剥離, 顎関節靱帯切断, 下顎骨

b

写真 3 術前X線写真(下方斜位撮影)
(a: 右側, b: 左側)

下顎頭を露出した. 下顎頭の変形および線維性癒着を認めたので, 下顎頸部を骨ノミにて離断し, 下顎頭を摘出. 左側腹部より皮膚弁(8×4cm)を切除, 表層を内側にして周囲を縫合し, 下顎頭切除部に挿入. 筋層縫合, 皮膚縫合を行ない, 手術を終えた.

しかし術後も開口状態は改善されなかったため, X線断層撮影, 側頭斜位上方向撮影, 眼窩・関節方向撮影の結果, 左側下顎骨筋突起上端前縁より前方に有茎性, 扇形に突出した境界明瞭な拇指頭大のX線不透過像を認めた. 前縁は上顎結節部を圧迫し, 同部に吸収像がみられた.

以上の所見より, 左側下顎骨筋突起部の骨腫の疑いの下に, 再度昭和44年11月■日手術を施行した.

前回同様全身麻酔下に, 口腔内より左側筋突起相当頰粘膜に切開線を入れ, 筋突起基部を露出, 骨ノミにて筋突起を離断す. 腫瘍および筋突起の摘出を試みるも口腔内よりの摘出は不可能であった. 術後13日, 開口域は上下中切歯間で 25mm.

昭和44年12月■日, 全身麻酔下, 頬骨弓上縁に沿う皮

写真 4 a) 左側断層撮影(左:閉口時, 右:開口時)
b) 右側断層撮影(左:閉口時, 右:開口時)
c) 頭部軸方向撮影

切を施し、鈍的に頬骨弓を十分露出し、筋突起を被う頬骨弓約 30mm にわたり切断。前回離断した筋突起は容易に露出されたが、腫瘤は頬骨内側に陥入していた。筋

突起に附着する側頭筋を切断し、筋突起、腫瘤に沿って周囲組織を剝離したところ、腫瘤前端は左側上顎結節に達し、圧迫吸収していた。筋突起と腫瘤を一塊として摘出することは不可能であったため、やむなく腫瘤基部にて分断し、筋突起と別個に摘出。離断した頬骨弓を整復、銀線にて結紮固定、筋層縫合、皮膚縫合を行ない手術を終えた。

術後数日間、左頬部、側頭部に弥漫性腫脹、発赤をみるも、6日目にはほとんど消退、開口域は6日目 23mm、13日目 29mm に改善された。

昭和45年5月■日、局所麻酔下に頬骨弓部銀線除去を行なった。

摘出術後7カ月、開口域 40mm、最大開口時下顎正中の左方 5mm 偏倚を認めたが、なんら機能的障害は認められなかった。

摘出物肉眼所見: 22×32×20mm の大きさの骨様組織で、前、内、外、上方が軟骨様硬、白色板状物にて被覆され、後方は筋突起尖端前縁に移行していた。矢状断面は筋突起移行部より放射状に伸展する骨梁がみられ、白色板状物は骨様構造とは境界明瞭、軟骨様であった。

病理組織学的所見: 腫瘤は良く発達した骨梁の形成がみられ、その表面にはかなり厚い軟骨層があり、さらにその表面に結合織性の被覆がみられた。軟骨層には大型の軟骨細胞が軟骨窩の中に入り、一定方向を保って配列、正常の骨端線におけると同様の化骨機転を示し、良く分化した海綿骨を形成していた。

病理組織診断: 骨軟骨性外骨腫 (osteocartilagenous Exostosis)

総括ならびに考案

開口障害の原因としては関節性、筋性、癰瘍性、神経性、炎症性、腫瘍性、外傷性によるものなどが挙げられる。

Thoma (1963)¹⁸⁾は顎関節そのものに関係しない、いわゆる偽顎関節強直症 False ankylosis として

- 1) 筋の感染による筋性顎関節強直症
- 2) 筋の萎縮または線維化
- 3) テタニーまたは破傷風によるもの
- 4) ノイローゼ、てんかんによる神経性のもの
- 5) ヒステリー性顎関節強直症

を挙げ、さらに機械的ブロック (Mechanical block) として、下顎骨筋突起の外骨腫、肥大、骨腫および骨軟骨腫の報告について述べている。下顎骨筋突起に発生し

a

b

写真 5 術前腫瘍部位 (a)
腫瘍摘出時 (b)

a

b

写真 6 摘出物所見 (a)
分割面所見 (b)

a

b

写真 7 病理組織写真 (H. E. 染色)
弱拡大 ($\times 3.4$) (a), 強拡大 ($\times 7.5$) (b)

表 1 筋突起腫瘍・増大報告例

	報 告 者	報告年度	性 年 令	部位	病理組織診断	病状自覚 期	腫瘍または 増大	皮 切 部 位	開口域の改善 (mm)
1	Shackelford & Brown	1943	♂ 15	左	Osteochondroma	3Y	腫 瘍	頬 骨 弓 部	12→正常
2	〃	〃	♂ 19	右	〃	2Y	〃	〃	10→正常
3	Brandt	1943	♀ 37	右	Exostosis	5Y	不 明	不 明	25→記載なし
4	Shackelford & Brown	1949	♂ 38	右	Osteochondroma	5Y	腫 瘍	頬 骨 弓 部	制限あり→〃
5	〃	〃	♂ 51	左	Osteoma	2Y	〃	〃	〃→〃
6	Brailsford	1952	♂ 24	左	Osteochondroma	1Y	〃	不 明	12→25
7	Holmes	1956	♂ 30	両	〃	16Y	〃	〃	7→28
8	〃	〃	♂ 36	左	〃	22Y	〃	〃	8→18
9	Van Zile & Johnson	1957	♂ 30	両	Exostosis	16Y	増 大	〃	7→記載なし
10	Levine et al.	1957	♀ 73	左	Osteochondroma	30Y	腫 瘍	〃	0.6→20
11	Dingman & Natvig	1957	♂ 27	右	〃	4M	〃	口 腔 内	8→25
12	Antoni et al.	1958	♂ 29	左	〃	5Y	〃	〃	正常→正常
13	Shira & Lister	1958	♂ 14	両	Developmental anomaly	9M	増 大	顎 下 部	8→42
14	Lewars	1959	♂ 15	右	Osteoma	9M	腫 瘍	側 頭 部	3→12
15	Lebo	1961	♂ 18	左	Osteochondroma	5Y	〃	頬 骨 弓 部	14→29
16	Mohnac	1962	♂ 18	両	〃	4Y	増 大	顎 下 部	18→35
17	Rowe	1963	♂ 15	〃	Developmental hyperplasia	3Y	〃	口 腔 内	15→35
18	〃	〃	♂ 15	〃	〃	2Y	〃	不 明	10→10
19	Lyon & Sarnat	1963	♂ 27	〃	Enlargement	14Y	〃	口 腔 内	11→35
20	Fitzpatrick	1970	♂ 27	〃	〃	9Y	〃	口腔内、頬骨弓部	5→40

た腫瘍および筋突起の増大した症例の報告は、われわれが渉猟した限りでは表1に示すごとくである。

下顎骨筋突起の腫瘍による顎関節強直症の報告は、Shackelford & Brown (1943)¹⁵⁾ (1949)¹⁶⁾、Brandt (1943)⁸¹⁾ Brailsford (1952)²⁾ らによりなされている。

また Van Zile & Johnson (1957)¹⁹⁾、Shira & Lister (1958)¹⁷⁾、最近では Fitzpatrick (1970)⁵⁾ らの筋突起増大による顎関節強直症の報告がみられる。

以上の報告による20例の病理組織学的診断では骨軟骨腫11例、筋突起の増大2例、外骨症2例、骨腫2例、筋突起の過剰発育および肥大3例であった。

われわれの症例の組織診断では骨軟骨性外骨腫(osteocartilagenous Exostosis)であったが、この名称は日本整形外科学会の骨腫瘍分類⁸⁾に基づいている。

伊丹(1966)⁸⁾によると骨軟骨性外骨腫の組織所見としては、腫瘍は表面より線維層、硝子軟骨層、石灰化軟骨層、さらにその下部の海绵骨様構造がみられるとしている。

Weinmann & Sicher (1947)²⁰⁾によると骨軟骨腫は腫瘍表層より結合織、線維性軟骨、石灰化軟骨、正常骨が層状に配列したもの、あるいは軟骨、類軟骨組織が不規則に入り込んだものなどが存在するとしている。

骨腫瘍の分類は、その組織像が部位により多様であり、診断も困難であり、その名称も統一されていない。

われわれの調査した報告例において、骨軟骨腫と記載のあった症例は、その組織所見よりほぼわれわれの症例と本態は同じであると考えられた。

報告例の骨軟骨腫以外の症例についてみると、筋突起の増大とした Shira & Lister (1958)¹⁷⁾、Lyon & Sarnat (1963)¹²⁾、Fitzpatrick (1970)⁵⁾ の症例では、一部外側面に軟骨様組織がみられたとし、本症例との区別は明らかではない。

一方、骨腫と診断された Shackelford & Brown (1949)¹⁶⁾の報告した51才、男性、左側に生じた腫瘍、および両側筋突起に発生した外骨症と診断された Van Zile & Johnson (1957)¹⁹⁾の報告した症例においては軟骨様組織はみられなく、また Rowe (1963)¹⁴⁾の両側筋突起の増大した2症例も単なる筋突起の増大であり、新生物とは認められず、本症例とは異なるものと思われた。

そこで報告例のうち病理組織診断がわれわれの症例骨軟骨性外骨腫と同じく、片側性、骨軟骨腫であった9例について検討を加える。

すなわち性別では男性8例、女性1例と男性に多く、年令では10才代3例、20才代3例、30才代2例、70才代1例、最年少15才、最年長73才であり、小数例ではあるが大部分が10～30才代にみられている。

また最終診断病院受診時の主訴では開口障害6例、開口時雑音2例、不明1例であった。自覚症状発現より受診までの期間では1年までのもの2例、2年ないし5年5例、20年ないし30年2例であり、2～5年の間経過したものが多かった。筋突起についての左右差では左6例、右3例であった。

全身他部における本症の発現頻度は、伊丹⁸⁾によると

全骨腫瘍中12%であり、性別では男3対女2の比率、発見年齢は10~20才頃としている。

本症診の断は主としてX線像によりなされるが、腫瘍の部位、大きさ、形状を認知するため特殊撮影法による注意深い検査が必要である。頭部後前撮影、側方撮影、顎関節撮影では像が重なり不明確である。Rowe¹⁴⁾は前記撮影法以外に頭部を患側に10度傾斜させた軸方向撮影により、片側性のものは明確となり、さらに断層撮影、パントモグラフをも推奨している。

臨床所見の特徴として Shira & Lister¹⁷⁾ は、1) 片側性、2) 顔面の非対称、3) 有茎性茸型、4) 上顎骨の圧迫吸収を挙げている。また Rowe¹⁴⁾ は片側性増大症例の徴候として 1) 開口障害および最大開口時下顎正中中の患側への偏倚、2) 患者頬骨弓部の隆起、3) 下顎運動時、下側頭窩に塊状物を触診あるいは捻髪音などの事項を記載している。さらに両側性増大においては、あらゆる方向への下顎の運動制限を特徴としている。すなわち筋突起部の腫瘍、増大は側頭骨、上顎骨、上顎結節、頬骨弓により囲まれた部位に拡大、あるいは周囲の骨に衝突することにより、上下方向の運動障害のみならず、患側への下顎側方運動制限を引き起し、開口不能さらには頬骨弓部の変形、顔面の左右非対称を発現するのである。

治療法としては、外科的に切除、摘出する以外に方法はない。手術における皮切部位では頬骨弓部4例、口腔内2例、不明3例であった。Rowe¹⁴⁾ は口腔内より骨バーにて筋突起基部を切断し、Shackelford & Brown¹⁶⁾ は頬骨弓部の皮切より頬骨弓を切断、腫瘍を摘出し、再び整復している。またこの際、顔面神経の損傷に注意する必要があると述べている。

開口域については上下切歯間で、術前の平均9mm、術後計測した5例についての平均は23mmであった。

最後に本疾患の病因についてみると、Geschickter & Copeland (1949)⁸⁾ は軟骨腫瘍は主として靱帯が骨膜を介さず、直接骨に付着する部分に発現すると述べ、Shackelford & Brown¹⁶⁾ は既往疾患に傷がないこと、靱帯付着部に発生していることより、筋突起部の骨膜のない部位に前軟骨芽細胞が引き出され、時とともに骨軟骨腫となったと述べている。一方、Weinmann & Sicher²⁰⁾ によると胎生期の筋突起には cartilagenous growth center が存在し、筋突起を形成し、この center 自体は消滅するとしている。Shira & Lister¹⁷⁾ は両側性の筋突起増大例の成因としてこの center の遺残より増大すると述べている。Lyon & Sarnat¹²⁾ は筋突起の変化は、側頭筋の牽引の結果であり、また他の可能性として上記 center の残存も考えられるとしている。また伊丹⁸⁾ によると骨軟骨性外骨腫の成因が骨端発育軟骨部の骨膜内に残った遺残軟骨より発生する説と、同部の先天あるいは後天的因子による異常発育であるという説をあげている。

以上のように成因については明らかでないが、両側性筋突起増大の成因としては、成長中心の残遺説、また片側骨軟骨性外骨腫の成因では、骨端発育軟骨部の骨膜内遺残軟骨または前軟骨芽細胞より発生すると考えるのが妥当であろう。

結 論

1. 開口障害を主訴として来院した25才男性に、顎関節強直症の診断のもとに、顎関節授動術を施行するも、開口障害を完全に改善せず、断層撮影による精査の結果、筋突起部の異常を発見した。
2. 筋突起上端の前縁より前方に突出し、上顎結節を圧迫吸収していた腫瘍および筋突起を口腔内より切断し、頬骨弓部より摘出した。その結果開口障害を完全に治癒せしめた。
3. 摘出物の病理組織診断は骨軟骨性外骨腫 (osteocartilagenous Exostosis) であった。
4. 開口障害の患者においては筋突起部の精査の必要性を示唆する興味ある症例であった。

稿を終るに臨み、御校閲を賜った渡辺義男前教授ならびに病理組織検査に懇篤な御指導を賜った本学第2病理学教室小川勝士教授に感謝の意を表します。

(本論文の要旨は昭和45年4月第24回日本口腔科学会総会において発表した。)

文 献

- 1) Antoni, A. A., Brown, A. & Johnson, J. H.: Osteochondroma of the coronoid process of the mandible. J Oral Surg 16: 514-517 1958.
- 2) Brailsford, J. F.: An unusual osteochondroma from the coronoid process of the mandible. Brit J Radiol 25: 555-556 1952.
- 3) Brandt, K.: Deformation congenitale de l'apophyse coronoid du maxillaire inferieur. Acta Orthop Scand 14: 219-224 1943.
- 4) Dingman, R. O. & Natvig, P.: Reduced mandibular motion due to osteochondroma of the coronoid process of the mandible. Amer J Surg 94: 907-910 1957.
- 5) Fitzpatrick, B. N.: Bilateral hyperplasia of the mandibular coronoid process. Oral Surg Oral Med & Oral Path 29: 184-190 1970.
- 6) Geschickter, C. F. & Copeland, M. M.: Tumors of bone. ed 3, Philadelphia, J B Lippincott Co, 1949.
- 7) Holmes, F. H.: Mandibular block by osteochondroma of coronoid process. Radiology 67: 578-581 1956.
- 8) 伊丹康人: 骨腫瘍. 第1版, 医学書院, 東京, p.5, 45-64 1966.
- 9) Lebo, C. P.: Osteochondroma of the mandibular coronoid process. Laryngoscope 71: 814-822 1961.
- 10) Levine, M. H., Chessen, J. & McCarthy, W. D.: Osteochondroma of the coronoid process of the mandible. New England J Med 257: 374-376 1957.
- 11) Lewars, P. H. D.: Osteoma of the mandible. Brit J Plast Surg 12: 277-283 1959.
- 12) Lyon, L. Z. & Sarnat, B. G.: Limited opening of

- the mouth caused by enlarged coronoid process.
J Amer Dent Ass 67 : 644-650 1963.
- 13) Mohnac, A.M. : Bilateral coronoid osteochondroma.
J Oral Surg Anesth 20 : 500-506 1962.
- 14) Rowe, N.L. : Bilateral developmental hyperplasia of
the mandibular coronoid process. Brit J Oral Surg
1 : 90-104 1963.
- 15) Shackelford, R.T. & Brown, W.H. : Osteochond-
roma of the coronoid process of the mandible.
Surg Gynec & Obst 77 : 51-54 1943.
- 16) Shackelford, R.T. & Brown, W.H. : Restricted
jaw motion due to osteochondroma of the coronoid
process. J Bone Joint Surg 31 A : 107 : 114 1949.
- 17) Shira, R.B. & Lister, R.L. : Limited mandibular
movements due to enlargement of the coronoid
processes. J Oral Surg 16 : 183-191 1958.
- 18) Thoma, K.H. : Oral Surgery. ed 4, St Louis, The
C V Mosby Co, p.606 1963.
- 19) Van Zile W.N. & Johnson, W.B. : Bilateral coro-
noid process exostosis simulating partial ankylosis
of the temporomandibular joint. J Oral Surg 15 :
72-77 1957.
- 20) Weinmann, J.P. & Sicher, H. : Bone and bones.
St Louis, The C V Mosby Co, p.386 1947.